

症 例 報 告

兩側先天性橈尺骨癒着症の1例

京都大学医学部整形外科学教室 (近藤鋭矢教授 指導)
高知赤十字病院 整形外科

服 部 奨 ・ 土 屋 良 之 ・ 大 谷 碧

A CASE OF BILATERAL CONGENITAL SYNOSTOSIS OF THE UPPER RADIO-ULNAR ARTICULATIONS

by

SUSUMU HATTORI, MIDORI ÔTANI and YOSHIYUKI TSUCHIYA

From the orthopedic clinic, Kōchi Red Cross Hospital
(Director ; Prof. EISHI KONDO, the Orthopedic Division, Kyoto University Medical School)

Recently we experienced a case of bilateral congenital synostosis of the upper radio-ulnar articulation of a 2 year old male and made some observations.

This malformation is very rare; 20 other cases reported in Japan up to date are summarized.

The patient has no hereditary pre-disposition, or other congenital deformity.

On the left side, arthroplastic Operation of the upper radio-ulnar articulation was performed, but we did not treat the right side, because the functional disturbance of the left upper extremity was more serious than the right.

We obtained considerable improvement of the function of the left upper extremity by our operation.

緒 言

先天性橈尺骨癒着症は1827年剖検の際 Lennoire が初めて発見し、その後先天性内外運動障碍として臨床的にも記載される様になり、X線が診断に応用されるに及び、次第に報告例は増加し、1932年 Chasin は文献上156例を集め、自家症例4例を報告している。本邦では1925年田代が1例を報告したのにはじまり、1954年坪井、桑田は自家症例1例を含め20例を集めている。

本症は両骨の癒着が中樞端にあるものが大部分を占め、稀に中央又は中樞及び末梢両端に癒着せるものがあるが、末梢端のみの癒着例は報告されていない。

我々は最近本症の両側中樞端癒着例を経験し、いさゝか知見を得たので、ここに報告し文献的考察を加え

たい。

症 例

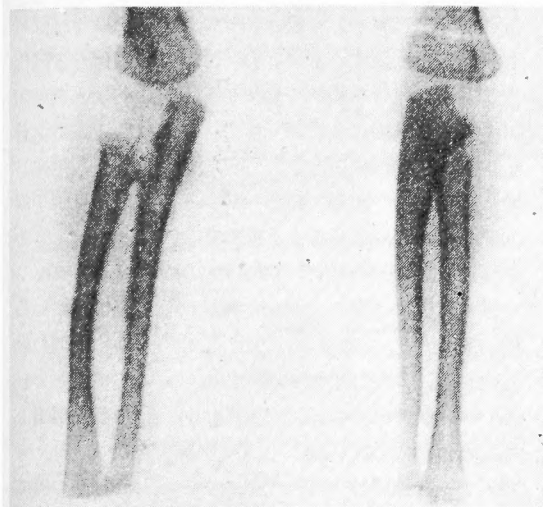
西○英○ 1才11ヶ月 男

主 訴：両側前腕軸旋運動障碍
家族歴：家系に奇形を認めない。

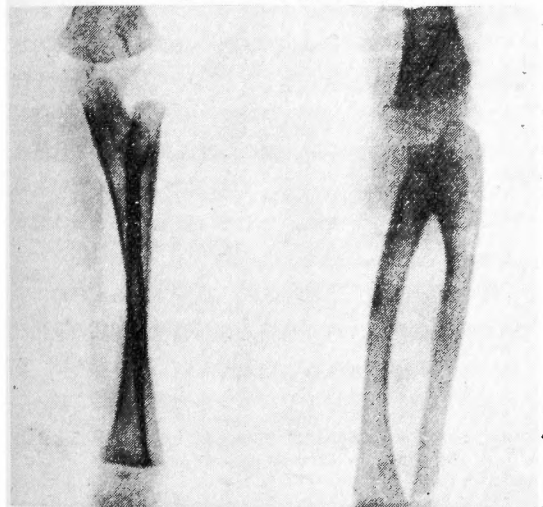
現病歴：分娩は満期安産で、発育は正常であつたが、2ヶ月前、お頂戴の手付が困難で、頭を掻くとき手背で行い、食事の時は左手で茶碗を上方よりつかみ、右手で箸をもつのにホークを持つように手背を上にもむけて、異様な格好をするのに両親が気づき来院した。

現 症：体格、栄養は中等度で、他に奇形或は変形は認めない。計測では両上肢に差違を認めない。前腕は自然下垂位で、右側は略々中間位をとつているが、

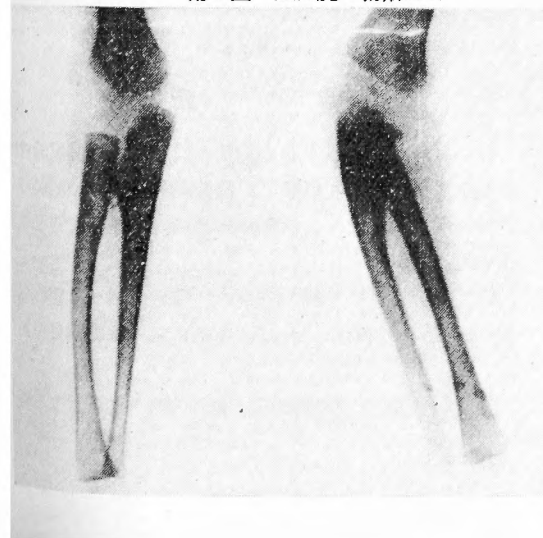
第1図 右前腕 (入院時)



第2図 左前腕 (入院時)



第3図 左前腕 術後51日



左側はそれより回内位つよく手掌は後方を向いている。軸旋運動は自、他動共に制限せられ、殊に左側は殆んど不能である。併し肩関節、肘関節、手関節には異常を認めない。

X線所見：両側共に橈骨々幹部に弓状彎曲を認め、その中枢端に右側約0.5cm 左側約1.5cm の骨性癒着を認めるが、橈骨及び尺骨々幹部の萎縮或は肥厚、橈骨小頭の脱臼は認められぬ。(図1, 図2)

手術所見：軸旋運動障碍の高度である左側に対し手術を施行した。即ち肘関節の伸展側で肘頭の下部に鋸型の皮切を加え、総指伸筋と尺腕伸筋の間を分け橈尺骨関節部に達した。軟部組織には著変は認められぬが、両骨は約1.5cm に亘り骨性に癒着し、僅かに凹溝を認めるにすぎない。癒着部を離断したが、軸旋運動障碍は改善されないで、更に離断部周囲、主として橈骨側の骨を削り断面を滑かにして、軸旋運動の可能を確かめ、筋膜及び皮膚縫合後、前腕を中間位に保持し、クラメル氏副子を装着した。

術後経過：手術創は1次的治癒を営み、術後13日目より時折副子を除去して自動運動を行わせしめ、20日目より連日強力にマッサージ、授動術を施行し、術後2カ月目、前腕は自然下垂位にて略々中間位をとり、他動的軸旋運動は自然下垂位より回外25度、回内70度可能で、自動的には回外20度、回内60度可能となり、左手で茶碗を持ち上げることが出来、所謂お頂戴も可能となり、一見動作及び肢位に不自然さを感じぬ程度に軽快した。(図3)

考 察

成因：内因説と外因説の両説が行われ、諸家の意見は一致していない。

Lieblein は胎生期の初期に於て前膊骨が2個に分離発育する過程の不全によるものとして内因説を主張している。比較解剖学的にも鳥類、哺乳動物では馬、駱駝、兎等には橈尺骨癒着が認められ、Kreglinger は個体発生学的に Atavismus (過去型)を示すものとしている。内因説の根拠としては遺伝的症例の存すること、他の奇形合併、両側性の多いこと等をあげているが Davenport 等は3代の間14例の本症を見出した例を報告し、其の他文献上多くの遺伝的症例の報告がなされているが、本邦例21例中同胞に本症を認めたものは2例である。奇形合併として Kreglinger は橈骨小頭の単独脱臼、刺指症等をあげているが、本邦例で

は奇形合併は21例中3例で、我々の症例に於ては、奇形合併も、又家系中に本症を認めていない。両側性のもは Chasin は146例中91例にあつたとしているが、本邦例では21例中11例である。性による差違は認められていない。

外因説としては Blumenthal 等は羊水過多、子宮の異常形態、又は胎内における上肢の下垂或は脱出等の主として胎内に於ける外的圧迫によりおこると主張し、その証拠として前腕が回内して、両骨が交叉位にある事実をあげている。併し我々の症例では外因説を肯定する既往歴を認めぬ。Chasin は中枢端のみの癒着例は毒素性外的因子により説明すべきであると、極めて稀である中枢及び末梢両端の癒着例にのみ内因説を認めているが、尙成因は未だ解明されていない。

病理：橈尺両骨の骨性癒着の程度は色々あり、橈骨上端の解剖学的特長を失つて橈骨々幹部が直接尺骨上端に移行しているもの、或は橈骨小頭が壘状に拡がつて尺骨と細い索をもつて連結しているもの等、その両極端の間には色々な移行型が存する。其の他、橈骨々幹部の肥厚或は彎曲、尺骨々幹部の萎縮、更には橈骨小頭の変形、脱臼を認めるものも少なくいとされている。尙レ線学的に年齢の増加につれて次第に強固な骨性癒着を示した例も追及されている。

軟部組織の変化に就いては Chasin の剖検例によれば、二頭膊筋と上膊筋は末梢側に於て約4横指に亘り癒着し、共同の附着部をもち、回内円筋の尺骨頭、及び回外筋は結合織化しており、回内方形筋も強い萎縮を認めたが、血管系及び神経系には異常を認めていない。

症 状：前腕は回内位に固定せられ、その肢位より回内運動も制限されるが、特有な症状は回外運動の不能であつて、乳児期においてはその肢位の異常及び不自然な日常動作により家人に気づかれることが多い。

肘関節及び手関節運動には異常を認めないことが多く、我々の症例でも異常を認めなかつた。稀に肘関節の屈伸運動障害の合併せし例の報告もあるが、此のような例は年長者に多いようである。

治療法：1895年 Kümmel が癒着部の離断を試みて以来、種々の手術法が試みられている。即ち、1) 癒着部を単に離断する法、或は離断した間に軟部組織、O. M. S. 膜等の中間挿入物を使用する法、2) 癒着部の離断と橈骨中枢端の切除、橈骨々幹部の中枢端とこ

れと接触する尺骨間に中間挿入物を使用する法、3) 上述の2法に線状又は楔状切骨術を加えて橈骨又は尺骨の彎曲を矯正するもの、4) 癒着部には何らの操作を加えず、尺骨を癒着下部で切離し、中間挿入物使用により尺骨上方に偽関節を形成、更に前腕下方で橈骨を切離し、周辺転位をおこさせる法、(柳谷、越川) 5) 癒着部より末梢で橈骨々幹部を切除し、尺側手根伸筋を橈骨外縁に移植して能動的回外運動を得ようとする法、(Galeazzi) 等の手術法があげられている。

併し文献には良好な手術成績を得たと報告している例もあるが、一般的に他の部の変化のために予期の如くならず、良好な手術成績を得ないものが多いとされている。飯野はその原因として、1) 癒合部を離断しても両骨間の回旋は思うように回復できない。2) 骨間膜が充分伸展性を獲得出来ない。3) 回外筋の機能不全のため能動的回外力が不充分である点をあげて、むしろ便宜肢位で強直させてしまうのも一法であらうと云つている。Chasin は回内位強度で機能障害の甚しいものに対し癒着部より末梢にて橈骨切骨術を行い、前腕の回内位を回転中間位に変更し、前腕の回転不能を肩関節に於ける上腕の回転運動によつて代償せしめる法を提案している。又回内位の著しくないものは機能障害が少いから、そのまま放置せよと云う論者も多いようである。

併し回内位著しく機能障害の高度であるものには手術療法が必要で、可及的筋、其の他軟部組織の変化の少い、且つ適応力に富む幼児において行ふならば、ある程度の効果を望むことが出来ると思われる。我々の例においても術後症状に多少の軽快を認めることが出来た。

また後療法は本症治療の予後を支配するものであるから、充分なマッサージ、理学的療法を可及的長期間行ふ必要のあることは勿論である。

結 語

1) 我々は1才11カ月の男子の両側先天性橈尺骨中枢端癒着症の1例を経験し、機能障害の少ない右側はそのまゝ放置したが、機能障害高度なる左側に対して手術療法を試みた。

2) 本症は極めて稀な奇形で、報告例は200例にみたす。我々の調査によれば、本邦に於ては21例目である。

3) 術後左側の機能障害は右側と略々同程度まで軽

快したが、満足すべき結果を得るにはいたらなかつた。併し今後長期に亘り後療法を行えば、より良好な結果を得る望みがあるものと考える。

文 献

1) Chasin : Synostosis radioulnaris sup. Cong., Z. Oth. chir., **56**, 353, 1932.
 2) Kreglinger : Ein Fall Von hereditärer, kongenitaler, doppelseitiger Synostose beider vorderarmknochen an der Proximaler Epiphyse, Z. Oth. **28**, 66, 1911.
 3) Lieblein : Zur Kasuistik u. Aetiologie der Angeborenen Verwachsung der Vorderarmkno-

chen ihrem Proximalen Abschnitte, Z. Orth. chir., **24**, 52, 1909.
 4) 田代 : 上方橈尺関節骨癒合の1例, 日整会誌, **1**, 187, 1925.
 5) 田島 : 先天性橈尺骨癒着症とその2例について, 日外会誌, **51**, 522, 昭25.
 6) 柳谷 : 越川 ; 先天性橈尺骨癒着症の1治験例, 日外会誌, **52**, 261, 昭26,
 7) 木村 : 先天性橈尺骨癒合症の1例, 外科, **15**, 67, 昭28.
 8) 坪井 : 桑田, 先天性両側橈尺骨癒着症の1例, 整形外科, **5**, 56, 昭29.
 9) 神中 : 神中整形外科学. 昭15.
 10) 神中 : 整形外科手術書, 昭27.